

# Adolescent chronic pain

Citation for published version (APA):

van den Bogert-Dekker, C. (2018). *Adolescent chronic pain: Rehabilitation treatment targeting pain-related fear*. [Doctoral Thesis, Maastricht University]. Maastricht University.  
<https://doi.org/10.26481/dis.20181123cb>

**Document status and date:**

Published: 01/01/2018

**DOI:**

[10.26481/dis.20181123cb](https://doi.org/10.26481/dis.20181123cb)

**Document Version:**

Publisher's PDF, also known as Version of record

**Please check the document version of this publication:**

- A submitted manuscript is the version of the article upon submission and before peer-review. There can be important differences between the submitted version and the official published version of record. People interested in the research are advised to contact the author for the final version of the publication, or visit the DOI to the publisher's website.
- The final author version and the galley proof are versions of the publication after peer review.
- The final published version features the final layout of the paper including the volume, issue and page numbers.

[Link to publication](#)

**General rights**

Copyright and moral rights for the publications made accessible in the public portal are retained by the authors and/or other copyright owners and it is a condition of accessing publications that users recognise and abide by the legal requirements associated with these rights.

- Users may download and print one copy of any publication from the public portal for the purpose of private study or research.
- You may not further distribute the material or use it for any profit-making activity or commercial gain
- You may freely distribute the URL identifying the publication in the public portal.

If the publication is distributed under the terms of Article 25fa of the Dutch Copyright Act, indicated by the "Taverne" license above, please follow below link for the End User Agreement:

[www.umlib.nl/taverne-license](http://www.umlib.nl/taverne-license)

**Take down policy**

If you believe that this document breaches copyright please contact us at:

[repository@maastrichtuniversity.nl](mailto:repository@maastrichtuniversity.nl)

providing details and we will investigate your claim.



## Summary



## SUMMARY

Chronic pain in children and adolescents is a common problem, affecting up to 25% of Dutch school children (0–18 years). With regard to the severity of the pain complaints, it has been reported that 5% of schoolchildren (8–16 years) have moderate to severe chronic pain problems that cause high pain intensity and moderate to high pain-related disability. Chronic musculoskeletal pain is one of the most reported chronic pain conditions in youth, next to chronic headache and chronic abdominal pain, and is most prevalent in older children and adolescents (8–18 years). Chronic musculoskeletal pain is defined as pain of a musculoskeletal origin and includes limb pain, back pain, Complex Regional Pain Syndrome, Complaints in Arm, Neck and Shoulder, Whiplash Associated Disorder, fibromyalgia, and joint hypermobility syndrome. Despite the high prevalence of this type of chronic pain, research on treatment possibilities for this population is relatively restricted. However, in the latest years, efforts have been made to develop theoretical insights into the working mechanisms for the development and maintenance of adolescent chronic musculoskeletal pain. This research also revealed opportunities to target treatment approaches. The focus of this dissertation is on treatment of adolescents with chronic musculoskeletal pain with a duration of complaints of at least 3 months.

For children and adolescents (8–18 years) with chronic musculoskeletal pain the negative consequences that are often reported are changes in social functioning such as less contact with peers, disturbances in school functioning and school absence, changes in general emotional well-being, increased levels of anxiety and depression. Specifically the detrimental effect of pain-related fear on pain-related disability in adolescents is increasingly recognized. It has been estimated that fear of pain accounts for 40% of the variance in pain-related disability. Therefore, one of the objectives of this dissertation was to develop an intervention specifically targeting pain-related fear in order to decrease pain-related disability.

As a result of emerging evidence on the role of pain-related fear in youth, the interpersonal fear avoidance model was developed in 2012. This model describes how pain can cause disability through activity avoidance due to pain-related fear and catastrophic thinking about pain. Compared with the original fear avoidance model for adults, the interpersonal fear avoidance model incorporates the social system in which the pain of the adolescent exists, expressed as the interaction with parents. In adults, graded exposure *in vivo* is an effective treatment to improve functioning. Graded exposure *in vivo* is a cognitive behavioral treatment that targets pain-related fear and disability through exposing patients to activities and situations previously avoided because of fear of pain or re-injury. Specifically for adolescents with chronic musculoskeletal pain, an interdisciplinary graded exposure program was developed to be offered in outpatient specialized rehabilitation care. The exposure program consists of an adolescent module and a module for parents. The exposure program was designed as an individual treatment for adolescents, whereas the module for parents was intended to be offered in a group setting. The interdisciplinary treatment team offering the program was led by a consultant in rehabilitation medicine, and further consisted of a psychologist, and a physiotherapist or occupational therapist. The parent module

of the exposure program was developed to involve the family system as part of the treatment of the adolescent. In addition, the exposure program for adolescents also included an additional physical training for adolescents diagnosed with joint hypermobility syndrome.

The main aim of this dissertation is to add to the scientific evidence on rehabilitation treatment for adolescents with chronic musculoskeletal pain, with the ultimate goal to ameliorate negative consequences of their complaints and increase their quality of life. The efforts towards reaching this goal consisted of the performance of a multicenter randomized controlled trial to study the effectiveness of the interdisciplinary exposure program compared with usual care in four Dutch rehabilitation centers. Further, the psychometric properties of a measurement instrument to identify pain related fear in Dutch adolescents have been studied.

**Chapter 2** describes the study protocol of a pragmatic randomized controlled trial that was designed to evaluate the effectiveness of a newly developed interdisciplinary graded exposure program for adolescents with chronic musculoskeletal pain compared with usual rehabilitation care in four Dutch rehabilitation centers. A pragmatic approach was chosen to ensure that results obtained from this study are most applicable to rehabilitation practice. Usual rehabilitation care is generally an interdisciplinary graded activity treatment that uses a time-contingent stepwise increase of the adolescents' activity levels to reduce functional disability. Adolescents between 12–21 years old, with chronic musculoskeletal pain, referred to outpatient rehabilitation treatment were eligible to participate together with their parents. Self-reported measurements were performed at baseline, and at 2, 4, 10 and 12 months after start of treatment. The primary outcome measure is functional disability, measured with the functional disability inventory. Secondary outcome measures are fear of pain, catastrophizing, perceived harmfulness, pain intensity, depressive symptoms and quality of life. Further, total direct and indirect costs and health-related quality of life will be measured. A process evaluation was designed to evaluate protocol adherence, patient centeredness of the exposure program and adolescent treatment expectations.

The results of the effect evaluation of the randomized controlled trial are presented in **Chapter 3**. Recruitment of participants was between august 2014 and September 2016, with a 12-month follow up. Data was analyzed by intention to treat linear mixed model analysis. Data was analyzed of in total 53 adolescents, predominantly female with a mean age of 16 years. Adolescent in the exposure program showed a clinically relevant and statistically significant decrease in functional disability compared with care as usual at all time points. For the secondary measures, only for perceived harmfulness a significant mean difference was found between the two treatment groups at all time points. Further, protocol adherence by the treatment teams in the exposure program was high and contamination of the intervention by the alternative intervention (contamination of the exposure program by usual care and vice versa) was below the threshold and therefore considered absent. Based on these results, it was concluded that in adolescents with chronic musculoskeletal pain and pain related fear, the exposure program leads to a clinically relevant and statistically significant larger decrease in functional disability than usual care does. Furthermore, results on protocol adherence and contamination imply an honest comparison between the two interventions.

In **Chapter 4**, the focus is on the quality of the delivery of the interdisciplinary graded exposure program as it was offered to the adolescents by the treatment teams of the four participating treatment centers. The objective of this study was to evaluate in greater detail whether the exposure program for adolescents with chronic musculoskeletal pain reporting pain related fear, was performed according to protocol (treatment fidelity), and whether it is feasible to implement the program in rehabilitation care. In this process evaluation, quantitative and qualitative data on participant characteristics (adolescents, parents and therapists), attendance and participants' opinion on the program were collected by means of registration forms, questionnaires and group interviews. To evaluate treatment fidelity, audio and video recordings of program sessions were collected and analyzed by two independent raters.

Thirty adolescents were offered the exposure program, of which 23 started the program. Adolescents attended on average 90% of the treatment sessions. At least one parent per adolescent participated in the program. Analysis of 20 randomly selected recordings of treatment sessions revealed that treatment fidelity of the adolescent module was high, since on average 81% of essential treatment elements were offered to the adolescents in the preparation phase, education phase and treatment phase of the program. Therefore, it was concluded that the interdisciplinary exposure program has been performed largely according to protocol. Adolescents considered the delivery of the program to be client-centered and parents considered the delivery of the program to be family-centered. Treatment teams expressed a favorable opinion about the exposure program and intend to implement the program within their rehabilitation centers. Therefore, implementation of the program is considered feasible in specialized rehabilitation care. Although treatment teams were trained for four days, they perceived good practice of the program challenging. In the future, the organization of regular intervention-sessions within the centers can help to ensure high quality program delivery. Based on the results of the randomized controlled trial it was concluded that the exposure program is effective in reducing functional disability and is feasible to be offered. Therefore, implementation of the program in rehabilitation care for adolescents with chronic musculoskeletal pain and pain-related fear is recommended.

Since pain-related fear is an important construct in the development and maintenance of chronic pain, it is essential to measure this construct carefully. The Fear of Pain Questionnaire (child version), originally developed in the USA, assesses pain-related fear in children and adolescents with chronic pain, and demonstrates sound psychometric properties. **Chapter 5** reports on the translation into Dutch language, and evaluation of psychometric properties of this measure for fear of pain and activity avoidance.

A cross-sectional study was performed in which after forward and backward translation of the original Fear of Pain Questionnaire (Child version) 86 adolescents (aged 11–22 years old) with chronic musculoskeletal pain completed an assessment containing the Dutch Fear of Pain Questionnaire, and questionnaires about demographics, pain catastrophizing, functional disability and pain intensity. Exploratory factor analysis resulted in a two-factor structure explaining 43% of the variance that was labeled a Fear of Pain subscale and an Avoidance of Activities subscale. Internal consistency was strong. Hypothesis testing to evaluate construct validity resulted in five out of six hypotheses that were confirmed about the direction and strength of the correlation between the constructs measured by the Fear of Pain Questionnaire child version and comparative constructs

(pain catastrophizing, functional disability and pain intensity). It was concluded that the Dutch version of the fear of pain questionnaire child version demonstrated good internal consistency and good construct validity in a population of adolescents with chronic musculoskeletal pain. Therefore, the Dutch questionnaire can be used in rehabilitation care to identify the presence of pain-related fear in Dutch speaking adolescents with musculoskeletal chronic pain.

In **Chapter 6** a general discussion on the main findings of this dissertation is provided. The main aim of this dissertation was to add to the scientific evidence on rehabilitation treatment for adolescents with chronic musculoskeletal pain, with the ultimate goal to ameliorate negative consequences of the adolescent's complaints and to increase their quality of life. It was concluded that the main study of this dissertation showed that an interdisciplinary graded exposure program is a valuable addition to the treatment possibilities available to reduce functional disability in adolescents with chronic musculoskeletal pain reporting pain-related fear. Furthermore, a Dutch version of the Fear of Pain Questionnaire child version was found to be useful for identification of pain-related fear in adolescents with chronic musculoskeletal pain.

To our knowledge this was the first randomized controlled trial evaluating the effectiveness of an interdisciplinary graded exposure program targeting pain-related fear in order to decrease functional disability in adolescents with chronic musculoskeletal pain. Due to a pragmatic approach in the RCT, the results of this trial are generalizable and highly applicable to daily rehabilitation practice, the setting in which the program ultimately is intended to be offered. Still, there were methodological challenges that had to be dealt with, especially in the randomized controlled trial.

One of the major problems in randomized controlled trials in children and adolescents with chronic pain is their relatively small trial size with the risk of low power when analyzing the data. Also in our case the desired 124 participants for the study were not attained. However, due to a larger mean difference in the primary outcome measure between the interventions, the power of our analyses is adequate. Furthermore, many previous performed randomized controlled trials evaluating treatment effects use waiting-list control or treatment as usual as control conditions. Choosing an active care as usual control intervention best suited our aim of designing an effectiveness trial. Further, measurement instruments form a basis in diagnosis, prognosis and evaluation of treatment in care and research in adolescent chronic pain. At the onset of the research presented in this dissertation, choosing appropriate and high quality measurement instruments was a challenge. However, advances have been made in the past years, for example in the development of theoretical models that allow for theory-driven treatment development and also theory driven selection of measurement instruments, or development of instrument measuring constructs such as pain-related fear, or recognition of parental influences, reflected in the development of instruments for parents or instruments with both an adolescent and a parent version. Taking the interpersonal fear-avoidance model into account, it is recommended to translate and validate additional fear of pain questionnaire to enable a full assessment of the presence of fear of pain in the family system of the adolescent. The Parent Fear of Pain Questionnaire measures parent pain-related fears in the context of their adolescents pain, and the Fear of Pain question-


naire Parent report could be used as a parent proxy report to assess pain-related fear in children and adolescents. For this last questionnaire, data on a Dutch translation has been collected and analysis is planned.

Currently, there are no solid estimates of the economic burden of adolescent chronic pain, although this information can be very useful for policy makers. Furthermore, little is known about potential cost savings by treatment or prevention of chronic pain. Very few studies have been performed outside the Netherlands. These studies, however, showed that the costs are substantial and that treatment can result in savings mainly in reduced health care utilization and reductions in parental missed work. Future studies are recommended to compare for example the cost-effectiveness of the exposure program to usual care in order to determine the economic value of the exposure program for rehabilitation care. Also in our randomized controlled trial, data for an economic evaluation of the new exposure program compared with usual care have been collected and can be analyzed to determine the cost-effectiveness of these interventions.

Finally, further research of graded exposure in vivo for adolescents with chronic pain could strengthen our confidence in the effectiveness of this type of treatment for this population. Researchers can consider single-case designs in order to overcome the challenge of small sample sizes in randomized controlled trials and increase the feasibility of performing a study. However, when still opting for a randomized trial design, a pragmatic approach will provide results that are most relevant for clinicians and policy makers for choosing between options of care.







## Samenvatting



## SAMENVATTING

Chronische pijn bij kinderen en adolescenten is een veelvoorkomend probleem waarmee naar schatting 25% van de Nederlandse schoolkinderen wordt geconfronteerd. Met betrekking tot de ernst van de chronische pijn is gerapporteerd dat bij 5% van de schoolkinderen (8–16 jaar) de pijnintensiteit hoog is en leidt tot matige en ernstige pijn gerelateerde beperkingen. Chronische musculoskeletale pijn is een van de meest voorkomende soorten chronische pijn bij de jeugd, naast chronische hoofdpijn en chronische buikpijn, en heeft de hoogste prevalentie bij oudere kinderen en adolescenten (8–18 jaar). Deze chronische pijn wordt gedefinieerd als pijn met een musculoskeletale oorzaak, waaronder pijn in de ledematen, rugpijn, complex regionaal pijnsyndroom, klachten aan arm, nek en schouder, whiplash, fibromyalgie en hypermobiliteitssyndroom. Ondanks dat deze vorm van pijn relatief vaak voorkomt is nog maar relatief weinig onderzoek gedaan naar hoe we deze jongeren kunnen behandelen. In de afgelopen jaren is steeds meer onderzoek verricht naar de theorie en de werkingsmechanismen van het ontstaan en in stand houden van chronische musculoskeletale pijn bij adolescenten. Uit dit onderzoek kwamen aangrijpingspunten voor behandeling naar voren. De focus van dit proefschrift ligt op behandeling van adolescenten met chronische musculoskeletale pijn bij wie de pijn langer dan 3 maanden aanwezig is.

De gevolgen van de chronische musculoskeletale pijn voor kinderen en adolescenten (8–18 jaar) die vaak worden gerapporteerd zijn veranderingen in sociaal functioneren zoals een verminderd contact met vrienden, verminderd functioneren op school, schoolverzuim, veranderingen in algemeen emotioneel welbevinden, verhoogde angst en depressie. Met name de negatieve invloed van de pijn gerelateerde angst op de beperkingen van de jongeren wordt steeds vaker aangetoond. Naar schatting wordt 40% van de variantie in beperkingen veroorzaakt door pijn gerelateerde angst. Een van de doelen van dit proefschrift was daarom het ontwikkelen van een interventie die zich specifiek richt op pijn gerelateerde angst om pijn gerelateerde beperkingen te verminderen.

Als gevolg van de groeiende kennis over de rol van pijn gerelateerde angst bij jongeren verscheen in 2012 het interpersoonlijk vrees-vermijdingsmodel. Dit model beschrijft hoe pijn beperkingen kan veroorzaken als gevolg van het vermijden van activiteiten vanwege pijn gerelateerde angst en catastroferende gedachten over de pijn. Vergeleken met het originele vrees-vermijdingsmodel voor volwassenen is binnen het interpersoonlijk vrees-vermijdingsmodel het sociale systeem meegenomen waarbinnen de pijn van de jongeren bestaat, met name de interactie met de ouders. Bij volwassenen is graded exposure in vivo effectief gebleken in het verbeteren van het functioneren. Graded exposure in vivo is een cognitieve gedragsbehandeling gericht op pijn gerelateerde angst en beperkingen door patiënten bloot te stellen aan activiteiten en situaties die zij normaliter vermijden vanwege pijn-gerelateerde angst of angst voor schade. Speciaal voor jongeren met chronische musculoskeletale pijn is dit programma vertaald naar een interdisciplinair graded exposure programma dat in poliklinische revalidatiezorg kan worden aangeboden. Het exposure programma is ontwikkeld als een individuele behandeling voor adolescenten, waarbij de ouders een aparte module in groepsverband wordt aangeboden. Het behandelteam bestaat uit de revalidatiearts als hoofd van het behandelteam, de psycholoog en de fysiotherapeut of ergotherapeut. De oudermodule van

het exposure programma is ontwikkeld om ook het systeem te betrekken bij de behandeling van de adolescent. Voor jongeren die gediagnosticeerd zijn met het hypermobilitéitssyndroom wordt de module voor adolescenten uitgebreid met een fysieke training.

Het primaire doel van dit proefschrift is om bij te dragen aan het wetenschappelijk bewijs over revalidatiebehandelingen voor adolescenten met chronische musculoskeletale pijn. Met als uiteindelijk doel om de negatieve gevolgen van de pijnklachten van deze jongeren te verminderen en hun kwaliteit van leven te verbeteren. Een gerandomiseerde gecontroleerde studie naar het effect van het graded exposure programma in vergelijking met de gebruikelijke zorg is uitgevoerd in vier revalidatiecentra. Daarnaast is ook de bruikbaarheid en psychometrische eigenschappen van een meetinstrument gericht op het in kaart brengen van pijn gerelateerde angst onderzocht.

In **hoofdstuk 2** wordt het studieprotocol voor de pragmatische gerandomiseerde gecontroleerde studie beschreven. Deze studie is ontwikkeld om de effectiviteit van het nieuw ontwikkelde interdisciplinaire graded exposure programma voor adolescenten met chronische musculoskeletale pijnklachten te vergelijken met de gebruikelijke revalidatiezorg in vier Nederlandse revalidatiecentra. Er is gekozen voor een pragmatische benadering van deze studie om te zorgen dat de resultaten het meest bruikbaar zijn voor de revalidatiepraktijk. Gebruikelijke revalidatiezorg is voornamelijk een interdisciplinaire graded activity behandeling waarbij op een stapsgewijze tijd-contingente manier het activiteitsniveau van de adolescent wordt verhoogd om functionele beperkingen te verminderen. Adolescenten tussen 12 en 21 jaar met chronische musculoskeletale pijn en een verwijzing naar poliklinische revalidatiebehandeling kwamen in aanmerking voor deelname samen met hun ouders. Vragenlijsten werden door de jongeren en ouders ingevuld voor aanvang van de behandeling (basislijn) en 2, 4, 10 en 12 maanden na start van de behandeling. De primaire uitkomstmaat van de studie is functionele beperkingen, gemeten met de 'functional disability inventory'. Secundaire uitkomstmaten zijn angst voor pijn, catastrofen, ervaren schadelijkheid, pijnintensiteit, symptomen van depressie en kwaliteit van leven. Verder werden ook totale directe en indirecte kosten en gezondheidsgerelateerde kwaliteit van leven gemeten. Er werd een procesevaluatie ontworpen om te onderzoeken hoe goed de therapeuten zich hielden aan het behandelprotocol en hoe patiëntgericht het exposure programma was. Daarbij werd ook gekeken naar de verwachtingen die adolescenten hadden ten aanzien van de behandeling.

De resultaten van het onderzoek naar de effectiviteit van het nieuwe exposure programma in de gerandomiseerde gecontroleerde studie zijn beschreven in **hoofdstuk 3**. Tussen augustus 2014 en september 2016 zijn jongeren geworven voor deelname aan deze studie, waarbinnen zij 12 maanden zijn gevolgd. De data is geanalyseerd volgens 'intention to treat linear mixed model'-analyse. In totaal is de data van 53 adolescenten geanalyseerd, voornamelijk van vrouwen met een gemiddelde leeftijd van 16 jaar. Bij de jongeren in het exposure programma was een klinisch relevante en statistisch significante vermindering in functionele beperkingen zichtbaar vergeleken met de jongeren in de gebruikelijke zorg op alle meetpunten. Voor de secundaire uitkomstmaten was er alleen voor ervaren schadelijkheid een statistisch significant verschil tussen de groepen op alle meetpunten. Daarnaast bleek dat de therapeuten die het exposure protocol hebben aangeboden zich in hoge mate gehouden hadden aan het behandelprotocol en dat de behandelingen vrij waren van elementen uit de behandeling waar deze mee vergeleken werd (contaminatie – Er

waren geen exposure elementen aanwezig in de gebruikelijke zorg en omgekeerd). Op basis van deze resultaten werd geconcludeerd dat bij jongeren met chronische musculoskeletale pijn en pijn gerelateerde angst het exposure programma tot een klinisch relevante en statistisch significante vermindering in functionele beperking leidt vergeleken met gebruikelijke zorg. Daarnaast impliceren de resultaten over het aanbieden van de behandeling volgens het behandelprotocol en contaminatie dat er een eerlijke vergelijking is gemaakt tussen beide behandelingen.

In **hoofdstuk 4** ligt de focus op de kwaliteit van de aangeboden interdisciplinaire graded exposure behandeling door behandelteams van de vier deelnemende behandelcentra. Het doel van deze studie was om in meer detail te onderzoeken of het exposure programma volgens protocol werd aangeboden aan de adolescenten met chronische musculoskeletale pijnklachten en pijn gerelateerde angst. Daarnaast werd gekeken hoe haalbaar het was om het exposure programma te implementeren in de revalidatiesetting. Voor deze procesevaluatie werden kwantitatieve en kwalitatieve data verzameld over deelnemerskenmerken (adolescenten, ouders, behandelaren), aanwezigheid en de meningen over de behandeling van adolescenten, ouders en behandelaren. Deze data werd verzameld op registratieformulieren, op vragenlijsten en in groepsinterviews. Om de integriteit van de aangeboden behandeling te onderzoeken werden audio en video opnames gemaakt van behandelsessies die vervolgens door twee onafhankelijke beoordelaars werden geanalyseerd.

Aan 30 adolescenten werd het exposure programma aangeboden. Drieëntwintig adolescenten zijn met het programma gestart. Deze jongeren hebben 90% van de behandelsessies gevolgd. Minimaal 1 ouder per adolescent nam deel aan de oudermodule. Uit analyse van 20 willekeurig geselecteerde opnames van de behandelsessies bleek dat de behandelintegriteit hoog was. Uit de opnamen bleek dat gemiddeld 81% van de essentiële behandel-elementen aan de adolescenten werd aangeboden in de intake-, educatie- en behandel-fase van het programma. Er werd daarom geconcludeerd dat het exposure programma voornamelijk volgens protocol is aangeboden. Adolescenten vonden het programma cliënt-gericht en ouders vonden het programma familie-gericht. Behandelteams hadden ook een positieve mening over het programma en hebben de intentie om het exposure programma in hun centrum te implementeren. Mede hierdoor wordt implementatie van het exposure programma als haalbaar beoordeeld voor de revalidatiesetting. Hoewel behandelteams een training van vier dagen hebben gevolgd vonden ze het toch een uitdaging om het programma goed aan te bieden. In de toekomst kunnen intervisie-bijeenkomsten binnen de behandelcentra helpen om de kwaliteit van het aanbieden van de behandeling te waarborgen. Op basis van de resultaten van de gerandomiseerde gecontroleerde studie wordt geconcludeerd dat het exposure programma effectief is in het verminderen van functionele beperkingen en dat het haalbaar is om dit programma aan te bieden. Daarom wordt implementatie van het programma in de revalidatiezorg voor adolescenten met chronische musculoskeletale pijn en pijn gerelateerde angst aanbevolen.

Omdat pijn gerelateerde angst een belangrijk construct is in het ontwikkelen en in stand houden van chronische pijn bij jongeren, is het zeer essentieel om dit construct goed in kaart te brengen. De oorspronkelijk in de Verenigde Staten ontwikkelde 'Fear of Pain Questionnaire' (kind versie) bleek goede psychometrische eigenschappen te hebben om pijn-gerelateerde angst bij

kinderen en adolescenten met chronische pijn te meten. **Hoofdstuk 5** beschrijft de Nederlandse vertaling en onderzoek van de psychometrische eigenschappen van dit meetinstrument voor pijn gerelateerde angst en vermijdingsgedrag.

Een dwarsdoorsnede onderzoek werd uitgevoerd waarin na vertaling en terugvertaling van de originele vragenlijst 86 Nederlandse adolescenten (11–22 jaar) met chronische musculoskeletale pijnklachten een aantal vragenlijsten invulden, waaronder de Nederlandse 'Fear of Pain Questionnaire', vragen over demografische kenmerken, pijn catastroferen, functionele beperkingen en pijnintensiteit. Uit een explorerende factor analyse bleek een twee-factor structuur die 43% van de variantie kon verklaren. De factoren kregen de labels 'fear of pain'- subschaal en 'avoidance of activities'- subschaal. Interne consistentie was hoog. Voor het onderzoeken van de constructvaliditeit werden zes hypothesen geformuleerd over de richting en de sterkte van de correlatie tussen het construct gemeten door de Fear of Pain vragenlijst en de constructen waarmee vergeleken werd (catastroferen, functionele beperkingen en pijnintensiteit). Vijf van de zes hypothesen kon worden bevestigd. Er werd geconcludeerd dat de interne consistentie van de Nederlandse versie van de 'Fear of Pain' vragenlijst kind versie hoog is en dat de constructvaliditeit goed is. Daarom kan de Nederlandse vragenlijst worden gebruikt in de revalidatiesetting voor het identificeren van pijn gerelateerde angst bij Nederlands sprekende jongeren met musculoskeletale pijn.

In **hoofdstuk 6** worden in een algemene discussie de belangrijkste bevindingen van dit proefschrift beschreven. Het belangrijkste doel van dit proefschrift was om bij te dragen aan de wetenschappelijke kennis over revalidatiebehandeling voor adolescenten met chronische musculoskeletale pijn. Met als uiteindelijke doel om de negatieve consequenties van de pijnklachten te verlichten en de kwaliteit van leven te verbeteren. Er werd geconcludeerd dat de belangrijkste studie van dit proefschrift liet zien dat een interdisciplinair graded exposure programma een waardevolle aanvulling is op de behandelmogelijkheden voor jongeren met chronische musculoskeletale pijnklachten en pijngerelateerde angst. Daarnaast is de Nederlandse versie van de 'Fear of Pain' vragenlijst een bruikbaar meetinstrument voor het identificeren van pijn gerelateerde angst bij jongeren met chronische musculoskeletale pijn.

Voor zo ver wij weten is dit de eerste gerandomiseerde gecontroleerde studie naar de effectiviteit van een interdisciplinair graded exposure programma gericht op pijn gerelateerde angst met als doel om functionele beperkingen bij jongeren met chronische musculoskeletale pijn te verminderen. Vanwege de pragmatische opzet van de studie zijn de resultaten generaliseerbaar en zeer van toepassing op de dagelijkse revalidatiezorg, de setting waarin de nieuwe behandeling uiteindelijk zou moeten worden aangeboden. Met name in de gerandomiseerde gecontroleerde studie waren er echter een aantal methodologische uitdagingen waar wij mee om moesten gaan.

Een van de grote problemen bij gerandomiseerde gecontroleerde studies bij kinderen en adolescenten met chronische pijn is dat het relatief kleine studies zijn, waardoor het risico op een lage power bij de analyse van de data bestaat. Ook in onze studie werd het gewenste aantal van 124 deelnemende jongeren niet gehaald. Maar door een groter gemiddeld verschil tussen beide groepen op de primaire uitkomstmaat was er bij onze analyses geen powerprobleem. Daarnaast hebben veel gerandomiseerde gecontroleerde studies die gekeken hebben naar effecten van

behandelingen gebruik gemaakt van wachtlijst controle of gebruikelijke zorg controle-behandelingen. Het kiezen van een actieve gebruikelijke zorg controle behandeling paste het best bij ons doel om naar behandel-effectiviteit (zoals deze in de praktijk zou zijn) te kijken.

Meetinstrumenten vormen de basis voor het vaststellen, voorspellen en evalueren van behandelingen bij jongeren met chronische pijn. Bij aanvang van ons project was het een grote uitdaging om geschikte meetinstrumenten te kiezen met een goede kwaliteit. De afgelopen jaren is echter wel vooruitgang geboekt op dit gebied. Bijvoorbeeld door de ontwikkeling van theoretische modellen wordt het ontwikkelen van behandelingen die op theorie zijn gebaseerd mogelijk en dat maakt het ook mogelijk om meetinstrumenten te kiezen op basis van deze theorie. Ook zijn er meetinstrumenten ontwikkeld voor het meten van constructen zoals pijn-gerelateerde angst. Verder heeft het erkennen van de invloed van ouders geleid tot het ontwikkelen van meetinstrumenten specifiek voor ouders of van meetinstrumenten waarvoor zowel een ouder als een kind-versie bestaat. Kijken naar het interpersoonlijk vrees-vermijdingsmodel wordt dan ook aanbevolen om ook andere 'Fear of Pain' vragenlijsten te vertalen en de kwaliteit te onderzoeken om op deze manier een omvattende meting van angst voor pijn te kunnen doen binnen het systeem van de adolescent met chronische pijn. De 'Parent Fear of Pain Questionnaire meet pijn-gerelateerde angst bij ouders in de context van de pijnklachten van hun adolescent. De 'Fear of Pain questionnaire ouder versie kan gebruikt worden als een proxy maat voor het meten van angst voor pijn van de adolescent. Voor deze laatste vragenlijst is data verzameld voor een Nederlandse versie van deze vragenlijst. Deze data moet nog worden geanalyseerd.

Op dit moment is er geen duidelijke schatting van de economische impact van chronische pijn bij adolescenten. Deze informatie kan zeer bruikbaar zijn voor beleidsmakers. Verder is ook maar weinig bekend over potentiële besparingen door behandeling van chronische pijn of preventie hiervan. Slechts zeer weinig studies zijn uitgevoerd op dit gebied, allen buiten Nederland. Deze studies lieten echter wel zien dat de kosten substantieel zijn en dat behandeling kan leiden tot besparingen met name in het gebruik van gezondheidszorg en in een vermindering van de productiviteitsverliezen van ouders die niet naar het werk gaan. Het wordt aanbevolen dat toekomstige studies zich richten op het vergelijken van bijvoorbeeld de kosteneffectiviteit van het exposure programma en de gebruikelijke zorg om de economische waarde van het exposure programma voor de revalidatiesetting te bepalen. Ook in onze gerandomiseerde gecontroleerde studie is de data verzameld die nodig is voor het uitvoeren van een economische evaluatie om de kosteneffectiviteit van het nieuwe exposure programma te bepalen.

Tot slot kan verder onderzoek naar exposure in vivo voor adolescenten met chronische pijn het vertrouwen doen groeien in de effectiviteit van dit type behandeling in deze populatie. Onderzoekers kunnen een single-case design overwegen als alternatief voor een gerandomiseerde gecontroleerde studie om op die manier de uitdaging van de studiegrootte te omzeilen en om de haalbaarheid van het uitvoeren van deze studie te vergroten. Wordt er toch gekozen voor een gerandomiseerde gecontroleerde studie, dan leidt de keuze voor een pragmatische benadering tot resultaten die het meest relevant zijn voor klinici en beleidsmakers die moeten kiezen tussen verschillende behandelingen.



